

特集 昭和大学の医療連携における歯学部の役割について

口唇口蓋裂の診断と治療

昭和大学歯学部歯科矯正学講座

榎 宏太郎

昭和大学における口唇口蓋裂および顎変形症治療の 歴史と Maxillofacial Conference (MFC)

1980年3月に昭和大学唇裂口蓋裂診療班 Showa University Cleft Lip & Palate Team (SCPT) が結成された。医学部より形成外科、小児科、耳鼻咽喉科、言語聴覚士、麻酔科、福祉相談室、歯学部より口腔外科、矯正歯科、小児歯科、補綴歯科、放射線科が参加し、総合的なチーム医療がスタートした。1981年、第5回日本口蓋裂学会総会において SCPT 結成を宣言し、さらに、American Cleft Palate-Craniofacial Association に登録申請を行い、正式に membership team となった。チーム医療として口蓋裂治療に取り組んだ日本で初めての医療機関である。昭和大学病院長の下で統括され、センター組織の一つとして、昭和大学病院附属昭和大学唇裂口蓋裂センターとして発足した¹⁾。初代センター長は昭和大学医学部形成外科学教室主任教授の鬼塚卓彌先生、副センター長には昭和大学歯学部歯科矯正学教室主任教授の福原達郎先生が就任した。

それまでの歴史をふり返ると、鬼塚先生は、1956年東京大学医学部を卒業後、整形外科と形成外科特別診療班に属し、特に口唇口蓋裂の診療に携わり、現在においても広く用いられている口唇形成術の術式である鬼塚法を発表した。1968年、鬼塚先生は昭和大学病院医学部形成外科の開設に携り、1974年形成外科学講座主任教授に就任した。一方1977年、昭和大学歯科病院が開設され、福原先生が歯科矯正学講座主任教授に就任した。福原先生は、1949年東京医科歯科大学を卒業後、矯正歯科に属し、「患者さんの求める医療を行う」という社会医療としての認知から、口蓋裂の矯正歯科治療に携った。当時、まだ日本において稀であった口唇口蓋裂治療にチーム医療として取り組む機関はなかった。1950年代、

形成外科学分野ではさまざまな手術法が確立されていく中、口蓋裂の矯正歯科治療は、一般的ではなかった。しかし、1975年5月25日、北海道苫小牧市で口蓋裂の子どもをもつ母親が、将来を悲観してその児を刺し殺してしまった。その事件記事とともに、口蓋裂児の口蓋閉鎖手術だけでは咀嚼障害、言語障害が残存し歯並び・咬合の治療が必要であること、口唇および口蓋閉鎖手術は保険適応となっているものの、矯正歯科治療は保険適応となっていないことが報道された。これが契機となり、「言語障害児を持つ親の会 全道協議会」が札幌で開かれた。やがてその声が全国に広がり、「口蓋裂児を救おう」という運動に発展し、大きな社会問題となった。1976年、日本矯正歯科学会は社会医療問題検討委員会を設置し、福原先生が担当理事に就任した。福原らの尽力の結果、1982年4月より、口唇口蓋裂に限定して矯正歯科治療の健康保険が適用された。加えて、育成医療（および更生医療）制度の適用も認められた²⁾。これらの社会的背景により、経済的理由による口唇口蓋裂の矯正歯科治療を受けられない患者は減少し、SCPT に来院される患者は増加した。その結果、昭和大学歯科病院矯正歯科に来院された口唇口蓋裂患者数は、2019年12月末現在で5,662名である。2017年には、昭和大学病院にあった唇裂口蓋裂センターを昭和大学藤が丘病院内に移し、大久保文雄（形成外科 教授）センター長、門松香一（形成外科 教授）副センター長、榎宏太郎（矯正歯科 教授）副センター長の体制で、新たに「昭和大学口唇口蓋裂センター」として再整備された。

昭和大学口唇口蓋裂センターにおける治療スケジュールや治療方針は、主に形成外科医、口腔外科医、言語聴覚士、小児歯科医および矯正歯科医が参加する症例検討会（以下形成 MFC: Maxillofacial Conference）において、最終決定を行う。一般的

な治療の流れとしては、形成外科による口唇裂・口蓋裂一次手術後、4歳までは言語と小児歯科治療が行われる。その後、乳歯咬合完成期の4歳頃に小児歯科から矯正歯科に紹介があり、検査・診断を行った上で、顎顔面形態および咬合に対する治療計画を立案する。患者によりさまざまなバリエーションがあるため一概には言えないが、永久歯萌出完了後2～3年（15歳頃）から、最終的な矯正歯科治療を行っていく。骨格的な大きさ（主に上顎骨と下顎骨）の不調和が大きく、外科的矯正治療を併用する場合は、成人までの長期にわたる矯正歯科治療が必要となる。

一方、1977年6月の開設以来、昭和大学歯科病院矯正歯科では、顎変形症患者に対するチームアプローチも行っている。また、1990年には顎離断の術前・術後の矯正歯科治療への健康保険適用が認可され、現在までに多数の顎変形症患者が当科を受診している^{3,4)}。顎変形症患者は高度な機能的、形態的、審美的障害を呈し、その診断には広範な知識と十分な経験が不可欠とされる。関連各科の専門的な意見の調整の場として口腔外科MFC（以下口外MFC：Maxillo Facial Conference）を設け、診断、治療方針の設定と実際の医療分担の決定による、いわゆるチームアプローチを行ってきた³⁻⁵⁾。顎裂部周囲の骨欠損が大きい場合には、チタンメッシュプレートを用いた骨造成を目的とした歯槽骨形成術を依頼しており、顎裂部のインプラント埋入に付随する顎裂部骨移植、その他に2014年より保険導入された歯科矯正用アンカースクリューの埋入依頼などは、すべて顎顔面口腔外科とのMFCによって治療方針が決定される^{6,7)}。

昭和大学歯科病院矯正歯科における術前顎矯正の導入

昭和大学口唇口蓋裂センターの特徴として、術前顎矯正の実施が挙げられる。唇顎口蓋裂児の裂にはさまざまな種類があり、その裂によって引き起こされる顔貌変形も多様性を示す。この多様性こそが唇顎口蓋裂治療がいまだ確立できない原因であり、中でも、顎裂によって併発した口唇鼻変形は特に多様な症状を示す。そのため、外科医はより多様な手術デザインを考案することで対応してきたが、結果的に唇顎口蓋裂治療がより複雑化する原因にもなっている。これらの問題点を解決すべく、当診療班で

は、佐藤らが中心となってPre-surgical Nasoalveolar Molding 法（PNAM）と呼ばれる、New York大学のGraysonらによって確立された矯正治療を2004年に日本で初めて導入した。PNAM法は従来の術前顎矯正の枠を超え、顎裂の縮小とともに口唇鼻部の軟骨、軟組織の形態改善を非外科処置にて可能にした方法である⁸⁾。治療期間は出生直後から初回口唇鼻形成手術までの約3～6か月間であり、この間に口唇鼻部の変形を軽減し症状を均一化することで口唇鼻形成手術の負担を軽減する。

術後の口唇鼻形態の有意性や、その後の修正手術回数の削減など⁹⁾、その有効性についての報告がある一方、効果がないとする報告もある。2017年頃からPNAMの長期予後が世界各地で報告されてきておりPNAMは効果があるとする報告が目立つようになってきたが^{10,11)}、いずれにせよ新生児期での加療はリスクも高く患者家族に負担も多いため施術にはしっかりとしたチーム医療体制が求められる。

当チームは麻酔科のサポートの下、口腔内印象採得を行っているが、病態への理解と治療への協力が可能なチームが必須である。つまり、チーム医療としての協力が困難な場合は、術前顎矯正の実施は困難を極める。術前顎矯正を行って偏位した上顎を整位しておくことは、手術が容易となる利点を有する反面、矯正装置の調整のため頻回の通院が必要となることから、患者家族にとっては時間的にも経済的にも負担が増す面があることを理解しておかなければならない¹²⁾。

口唇口蓋裂治療に対する集学的治療の必要性について

チーム医療体制の必要性について前述したが、初回口唇形成術後も継続した集学的アプローチが必須である。口唇口蓋裂の手術は、少なくとも3回以上の手術が必要である。手術は形成外科によって行われ、①生後3か月前後の口唇鼻形成術 ②1歳前後の口蓋形成術 ③乳歯列期または混合歯列期（5～10歳頃）の顎裂部骨移植術の3回が最低回数である。しかし、口唇口蓋裂の治療は裂を閉鎖する手術だけではなく、さまざまな専門診療科によって行われる。小児科では先天異常のスクリーニングが行われ、特に心疾患の合併の可能性に着目する。哺乳障害が原因となり栄養障害を引き起こさないよう、哺乳指導や離乳指導も行われる。耳鼻咽喉科では、滲

出性中耳炎を併発しやすいため、鼓膜の切開やチュービングが必要となる。聴覚障害は言語の発達を遅延させるため、滲出性中耳炎の治療とともに言語聴覚士の言語訓練も開始される。0歳から小児科、形成外科、耳鼻咽喉科等の医科に通院していた患者は、1歳半になると、歯科病院の小児歯科への通院を開始する。4歳になると小児歯科から矯正歯科が紹介され、矯正歯科への通院が開始する。

口唇口蓋裂患者の口腔内の特徴は、顎裂部による連続性の断たれた歯列弓、先天欠如歯・過剰歯・埋伏歯、歯の形態異常、浅い口腔前提、上顎骨劣成長による反対咬合などが挙げられ、これらの口腔内症状は口腔内清掃をより困難にさせる。加えて幼少期から矯正治療を行うため、装置装着による清掃性の複雑化によって、さらにう蝕リスクを増加させる。矯正治療終了後、歯の先天的な欠如や形態異常がある場合、歯冠補綴治療やインプラント治療を行う必要がある。

このように、口唇口蓋裂の治療は、単科では決して治療を完遂することのできない高度な治療であり、さまざまな専門診療科の協力により成り立っている。

昭和大学歯科病院における口唇口蓋裂治療の流れ

患者が4歳となる年度に、小児歯科は矯正歯科への初診相談を依頼する。初診担当医は、現段階での口腔内の状況を判断し、大まかな治療の流れや顎裂部骨移植について説明する。初診相談ののち、口腔内写真、顔面写真の撮影が行われ、相談日の診察は終了となる。写真をもとに症例の難易度から担当医が決定され、検査が開始される。診断用模型の印象採得、歯科パノラマX線写真撮影、頭部X線規格写真撮影、顎裂部のデンタルX線写真撮影、歯科用コーンビームCT撮影、下顎運動検査等を行い、顎顔面形態および顎裂部を評価・診断する。矯正歯科診断後、形成MFCに症例を提示し4歳から6歳もしくは8から9歳などの具体的な顎裂部骨移植の時期や矯正歯科治療の方針が決定される。矯正歯科によって決定した事項を全てセンター内で共有するため、MFCは毎月2回開催されており、うち1回は矯正歯科、形成外科、小児歯科、リハビリテーションセンターの言語聴覚士の責任者によって検討される。具体的には、矯正歯科診断後、顎裂部骨移植術前、一期矯正歯科治療開始時、二期矯正開始

時、必要に応じて顎離断手術前などの時期に検討される(図1)。

口唇口蓋裂患者における矯正歯科治療のタイミングは、術前顎矯正(新生児期・乳児期)、一期治療(乳歯列・混合歯列期)、および二期治療(永久歯列期)の3段階の矯正歯科治療に分類される。術前顎矯正は、必要に応じて行われる。乳歯列期では、明らかな上顎の劣成長、歯列の狭窄に対する治療を行うが、近年の手術法の発展により明らかな上顎の劣成長、歯列弓の狭窄・ギャップ、歯軸の傾斜を伴う患者は減少し、顎裂部および永久歯萌出の経過を観察する。顎裂部骨移植の時期は犬歯萌出期で行うことがゴールドスタンダードとされているが、当科および形成外科の見解として、顎の小さい東洋人の上顎中切歯の捻転、裂側の中・側切歯が顎裂部に萌出してしまうことへの懸念、加えて社会的配慮を理由として、就学前の早期顎裂部骨移植術を予定している¹³⁾。一期治療では、口唇口蓋裂患者特有の上顎骨の劣成長、歯の異所萌出および埋伏歯などが認められ、上顎前方牽引装置や、リングルアーチ、拡大床など、顎顔面成長発育および歯列状況に合わせた治療を行う。二期治療では、一期治療終了後の後戻りや軟組織の拘縮に伴う歯列の変化、先天的な歯の欠損、外科手術を伴う矯正歯科治療など、口唇口蓋裂患者特有の要因を考慮し、緊密な咬合を目指す(図2)。

以上のように口唇裂・口蓋裂患者は非常に多くの診療科で診察を受けながら、矯正歯科には約15～20年もの期間、通院することになる。このことは、患者本人だけでなく、保護者の精神的、肉体的、経済的負担は計り知れない¹⁴⁾。したがって、可能な限り少ない手術回数と治療期間の短い矯正歯科治療が望まれることは言うまでもなく、われわれは可能な限り、治療結果からの科学的根拠に基づき、確実に効率的な治療目標を実現するために努力しなければならない。矯正歯科治療のゴールは、口唇口蓋裂の有無に限らず、上下歯列弓の前後的位置とその顎態に対する適正な歯軸および緊密な咬合の確立を目指すことを前提に、患者個人に適した機能を備えた歯列、建築学的な用語で表される「機能美」を獲得することが目標である。しかし、口唇口蓋裂患者の特徴である顎裂部骨移植や、回避することのできない口唇裂・口蓋裂一次手術によって引き起こされる上

顎骨の成長抑制や異所萌出など、今後究明すべき課題が山積みである。

昭和大学歯科矯正学講座における口唇口蓋裂研究

本講座における研究の目標は、いかに科学的に矯正歯科臨床における諸問題を解決するかの一点にある。CBCT の開発をはじめとして、3次元画像処理と生体力学的計算を含むシミュレーションや分子生物学など歯科矯正学以外のさまざまな領域における先端技術を積極的に導入することによって、より高度な診断技術と治療方法を開発していかなければならない¹⁵⁾。そして、それぞれの研究は、「ヒトという生物における咀嚼の意味」および「顎顔面領域の健全性」という大きな観点から、常に検証される

べきであると考える。口唇口蓋裂患者における矯正歯科治療に関連する研究として、効率的な顎裂部骨移植術を行うための再生医療を主軸とした研究、適切な成長発育を獲得するために必要な要因の解明、疾患が歯列に及ぼす影響を解明するための検査・診断法の開発など多岐にわたる。顎裂部骨移植についての研究では、頭蓋顎顔面の発生に關与する神経堤由来細胞を、マウス頭蓋骨に移植し良好な成績を得た¹⁶⁾。神経堤由来細胞は、人体のあらゆる組織に未分化の状態が存在し、中でも鼻腔粘膜・鼻甲介においては高密度に存在しており、口唇裂・口蓋裂一次手術においてアプローチ可能な範囲にあり、顎裂部骨移植を行う際にゴールドスタンダードとされている腸骨に代わる新たな細胞ソースとして着目し

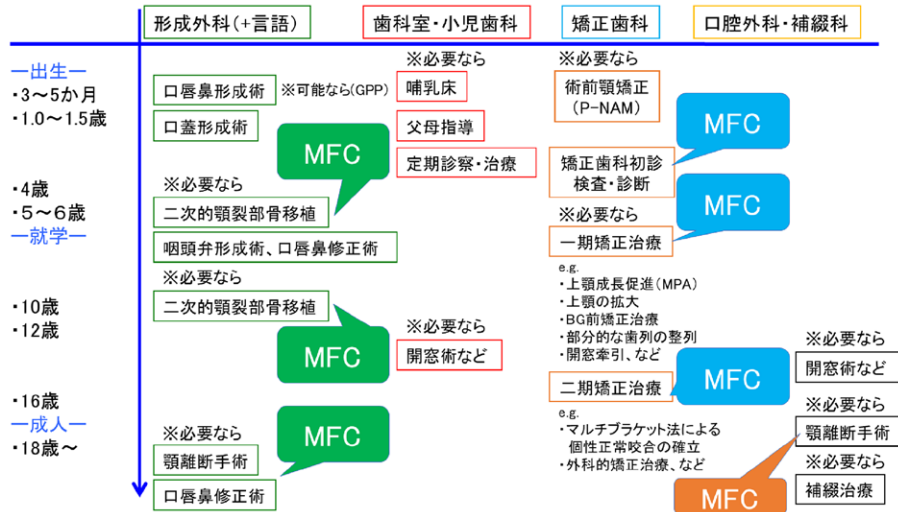


図 1 各診療科の治療の流れと MFC 開催時期

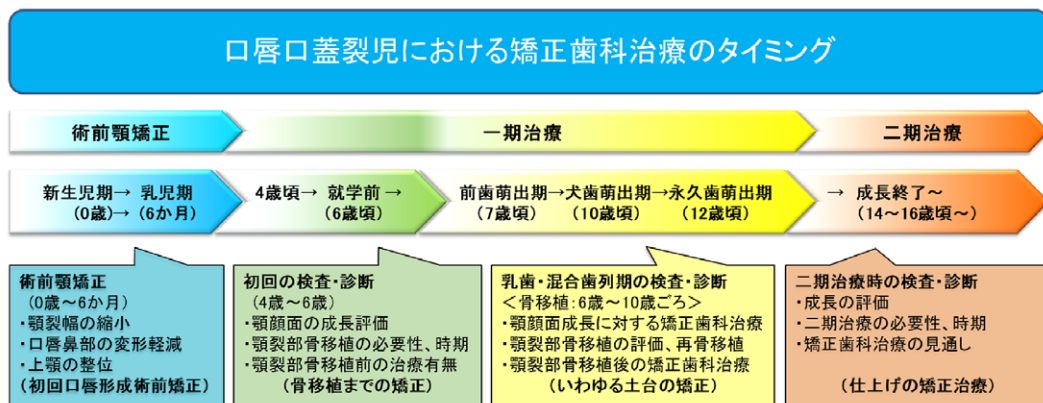


図 2 口唇口蓋裂児における矯正歯科治療のタイミング

顎裂部骨移植術の評価方法
2D → 3D → 3D modelへ



図 3 歯科用コーンビーム CT データを用いた上顎骨 3D モデル

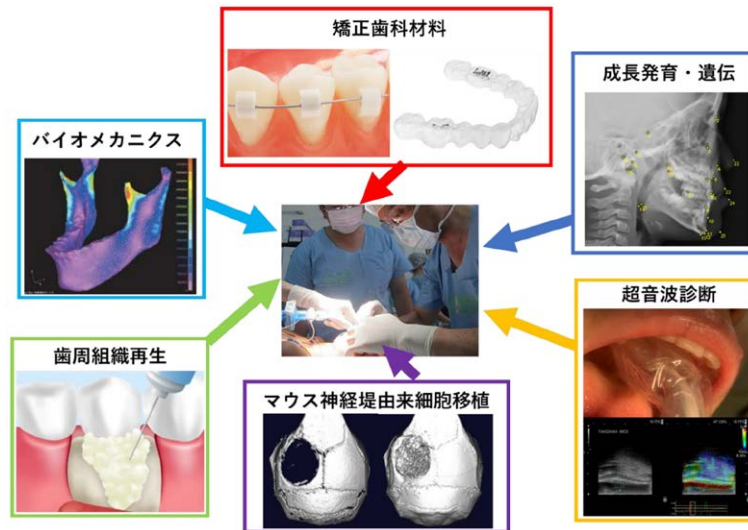


図 4 本講座における口唇口蓋裂治療に関する研究

た。成長発育に関しては、早期顎裂部骨移植と犬歯萌出期の顎裂部骨移植を比較し、手術を伴う矯正歯科治療移行率や、装置の使用率、再骨移植術について報告した¹⁷⁾。その他に、歯科用コーンビーム CT データと 3D プリンターを用いた上顎骨実態モデルの作製が挙げられる。技術や時間、コストが原因で実現できていなかった 3 次元モデルでの口蓋裂の把握は、近年の 3D 技術の発展により短時間、低コストで実現することが可能となった。当講座では、歯科用コーンビーム CT データを用いて上顎骨 3D モデルを作成し、埋伏した永久歯胚に色を載せること

で、顎裂部と永久歯胚の位置関係をモデル上で確認することを可能とした¹⁸⁾。近年の 3D モデル技術開発によって、術前に顎裂部の大きさや形態を正確に把握することが可能であり、加えて顎裂部の体積をより正確に測定し、必要移植骨量を事前に確認可能とした報告も散見する¹⁹⁾。口頭や図式で理解にくい術式の共有も、実際に切開線やアプローチ方法を模型上で示すことができる。さらに、普段観察できない視点から観察可能であるため、教育資料としての実用性も高く、患者や家族への説明媒体としても有用である (図 3)。

本講座における口唇口蓋裂治療における目標は、治療の質を上げるための研鑽はもちろんのこと、研究により「客観的な評価を行うことのできる検査」および「科学的根拠をもった診断」を行い、かつ口唇口蓋裂患者の「個々の口腔内に適した医療を提案・提供できるようにすること」と言える。現在、昭和大学口唇口蓋裂センターには、日本全国から治療を受けるために多くの患者さんが来院される。これからも、昭和大学口唇口蓋裂センターとして日々の研鑽を忘れず、安心安全で、科学的根拠を持った医療を提供できるよう努力したい（図4）。

謝辞 本特集の執筆にあたりご協力いただきました、当講座 中納治久准教授、高橋正皓講師、芳賀秀郷講師、佐藤友紀兼任講師、長濱諒助教、吉田寛助教、形成外科MFC系の皆さまに、心より感謝申し上げます。

文 献

- 1) 昭和大学口蓋裂診療班（SCPT）業績集. 1980年～1994年. 1995.
- 2) 福原教授退任記念事業実行委員会. 福原達郎教授退官記念誌「心の財」. 東京: 創文社; 1993. pp3-28.
- 3) 三河雅敏, 飯田真由美, 斎藤 茂. 昭和大学歯科病院矯正科に来院した顎変形症患者の臨床統計的調査. *Orthod Waves Jpn Edit.* 2004;63:49-59.
- 4) 新真紀子, 山口徹太郎, 栗原祐史, ほか. 昭和大学歯科病院における10年間の顎変形症治療に関する検討. *日顎変形会誌.* 2012;22:264-269.
- 5) 加藤博重, 横宏太郎, 滝沢良之, ほか. 矯正科, 口腔外科, 補綴科のチーム・アプローチによる高度成人顎変形症の一治験例について. *昭和歯会誌.* 1988;8:114-123.
- 6) 太田瑞穂, 松井義郎, 高江洲慶, ほか. 自家骨細片とチタンメッシュを用いた歯槽堤形成術に関する臨床的研究. *日口腔インプラント会誌.* 2004;17:462-469.
- 7) 栗原祐史, 安 吉祐, 樋口大輔, ほか. 歯槽骨延長術とインプラント義歯により顎裂部を補綴修復した唇顎口蓋裂の1例. *日口蓋裂会誌.* 2018;43:223-228.
- 8) 佐藤友紀, 倉林仁美, 百瀬之男, ほか. 新生児新術前矯正治療導入による昭和大学口蓋裂診療班における治療成績の向上とその効果について. *昭和医会誌.* 2005;65:285-288.
- 9) Grayson BH, Santiago PE, Brecht LE, *et al.* Presurgical nasoalveolar molding in infants with cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J.* 1999;36:486-498.
- 10) Maillard S, Retrouvey JM, Ahmed MK, *et al.* Correlation between nasoalveolar molding and surgical, aesthetic, functional and socioeconomic outcomes following primary repair surgery: a systematic review. *J Oral Maxillofac Res.* 2017;8:e2. (accessed 2020 Jul 1) <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC5676312/pdf/jomr-08-e2.pdf>
- 11) Bonanthaya K, Nayak T, Bitra S, *et al.* An assessment and comparison of nasolabial aesthetics in bilateral clefts using the anatomical subunit-based scale: a nasoalveolar moulding versus non-nasoalveolar molding study. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2019;48:298-301.
- 12) Singer E, Daskalogiannakis J, Russell KA, *et al.* Burden of care of various infant orthopedic protocols for improvement of nasolabial esthetics in patients with CUCLP. *Cleft Palate Craniofac J.* 2018;55:1236-1243.
- 13) 大久保文雄, 門松香一. 顎裂部骨移植術 良好な骨架橋を形成するために. *形成外科.* 2018;61:815-823.
- 14) 野口規久男. 口唇裂口蓋裂児の矯正治療期における精神医学的問題. *日口蓋裂会誌.* 1995;20:181-192.
- 15) K Maki, N Inou, A Takanishi, *et al.* Computer-assisted simulations in orthodontic diagnosis and the application of a new cone beam X-ray computed tomography. *Orthod Craniofac Res.* 2003;6 Suppl 1:95-101;discussion 179-182.
- 16) 吉田 寛, 須澤徹夫, 高橋正皓, ほか. 鼻甲介に含まれる神経堤由来細胞の骨誘導を応用した骨移植への検討. *日口蓋裂会誌.* 2018;43:184.
- 17) 嶋崎 絢, 長濱 諒, 塩竈素哉. 昭和大学口唇口蓋裂センターにおける骨移植時期の違いによる顎顔面成長評価. *日口蓋裂会誌.* 2019;44:115.
- 18) 佐久間優弥, 田代 慎, 横宏太郎. 口唇口蓋裂患者の永久歯胚を含んだ上顎骨 3D モデル作成. *日口蓋裂会誌.* 2018;43:188.
- 19) Korn P, Ahlfeld T, Lahmeyer F, *et al.* 3D printing of bone grafts for cleft alveolar osteoplasty -*In vivo* evaluation in a preclinical model. *Front Bioeng Biotechnol.* 2020;8:217. (accessed 2020 Jul 1) <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC7109264/pdf/fbioe-08-00217.pdf>